



TITLE:

外翻を呈した小児異所性尿管瘤の
1例 --外科治療に関する文献的考察
を含めて--

AUTHOR(S):

朝倉, 博孝; 田所, 茂; 実川, 正道

CITATION:

朝倉, 博孝 ...[et al]. 外翻を呈した小児異所性尿管瘤の1例 --外科治療に
関する文献的考察を含めて--. 泌尿器科紀要 1990, 36(6): 687-690

ISSUE DATE:

1990-06

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/116925>

RIGHT:

外翻を呈した小児異所性尿管瘤の1例

—外科治療に関する文献的考察を含めて—

国立栃木病院泌尿器科 (部長: 田所 茂)

朝倉 博孝*, 田所 茂

慶應義塾大学医学部泌尿器科学教室 (主任: 田崎 寛教授)

実 川 正 道

A CASE OF EVERTING ECTOPIC URETEROCELE IN CHILD

—CONTROVERSY IN THE SURGICAL TREATMENT—

Hirotaka Asakura and Shigeru Tadokoro

From the Department of Urology, Tochigi National Hospital

Seidoh Jitsukawa

From the Department of Urology, Keio University, School of Medicine

A 4-year-old girl with the history of repeated urinary tract infections was referred from the pediatric department to our department on January, 1987. Under the diagnosis of right ectopic ureterocele of everting type with complete duplication of renal unit, the one-stage operation, that is, right heminephroureterectomy with complete excision of the ureterocele and ureteral stump was carried out on January 27, 1987. Reimplantation of the orthotopic mate ureter was done because of injury to lower part of the mate ureter during operation, although reflux of the mate ureter did not exist. After the operation, the voiding symptom became better except for large residual urine volume (300 ml). In order to protect renal function, intermittent catheterization was carried out. Two years and 8 months after that operation, residual urine volume was reduced to 20 ml. Judging from the literature and our experience, if the patient is not in a severe condition, we recommend one-stage operation, that is, total correction (a single operation designed to correct abnormalities of the upper and lower urinary tract) for ectopic ureterocele in children.

(Acta Urol. Jpn. 36: 687-690, 1990)

Key words: Ectopic ureterocele, Everting type, Surgical treatment

緒 言

異所性尿管瘤は、重複腎盂尿管に合併することが多く小児難治性尿路感染症の原因として念頭に置くべき疾患である。最近、本邦でも報告例は増加しており、必ずしもまれな疾患とは言えない。しかしながら、本疾患に対する治療方針はまだ確立されておらず、尿管瘤、尿管と膀胱接合部を含めた下部尿路の処置、一期的手術か二期的手術か、あるいは、尿管瘤の経尿道的切除術の是非など議論の分かれるところである。われわれは、4歳の女児で右完全重複腎盂尿管に合併した外翻性異所性尿管瘤の症例を経験し、一期的手術を施

行したところ良好な結果を得た。この症例の臨床経過を報告し、特に本疾患に対する外科的治療における文献的考察にも言及した。

症 例

患者: 4歳、女児

主訴: 排尿時痛、頻尿

既往歴: 特記すべきことなし。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1986年1月より、排尿時痛および頻尿が出現し、近医において抗菌剤が投与されたが、症状は軽減増悪を繰り返していた。なお、尿失禁は認めなかった。1986年6月、同症状に肉眼的血尿と発熱が加わり近医より本院小児科へ紹介された。難治性膀胱炎の診

*現: 警友総合病院泌尿器科

断のもとに6カ月間、種々の抗菌剤が投与されたが、症状は改善しなかった。先天性尿路奇形症の可能性も考慮され排泄性尿路造影を施行したところ、右水腎症および膀胱内の巨大な陰影欠損を認めた。1987年1月、精査治療目的で本院泌尿器科へ入院となった。

初診時現症：身長 105 cm、体重 17 kg、胸腹部理学的異常所見を認めず、外生殖器にも異常所見を認めなかった。

入院時検査所見：末梢血、肝腎機能、血清電解質は正常。尿沈渣では、赤血球および白血球を少数認め、尿細菌培養は陰性であった。

画像診断：排泄性尿路造影では、左側尿路系には異常は認めなかったが、右腎の造影不良および膀胱内に存在する表面平滑な巨大な陰影欠損が認められた。明瞭に重複腎盂尿管は示されなかったが、上部腎杯の不明瞭な所見より重複腎盂尿管の可能性が示唆された (Fig. 1)。超音波検査において、膀胱内の腫瘍の性状は、径 4×2 cm の cystic mass であり、尿管瘤が強く疑われた。排泄時膀胱尿道造影では、造影剤は苦痛なく 300 ml~400 ml まで注入可能で、瘤所属尿管、姉妹尿管共に明かな膀胱尿管逆流は認めなかった。しかし、排尿するに従い右尿管瘤が外翻するのが確認され、いわゆる everting type の尿管瘤と考えられた (Fig. 2)。腎シンチグラムでは、左腎は正常に描出されるが、右腎については上半腎部は描出されず、下半腎部は描出不良を認めた (Fig. 3)。一方、腹部 CT では、右上半腎部の実質はほとんど認めず、右下半腎部は実質は良く保たれていた。



Fig. 1. IVP revealed right hydronephrosis with the nonvisualized upper pole and a large intravesical filling defect preoperatively.

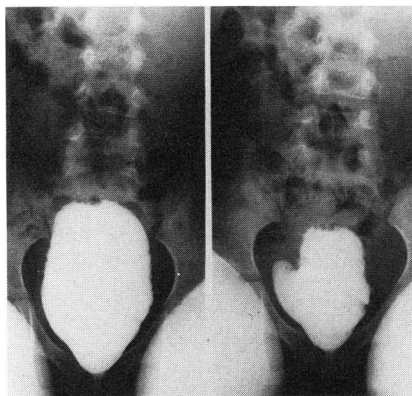


Fig. 2. Voiding cystourethrography revealed eversion of uretercele without reflux.

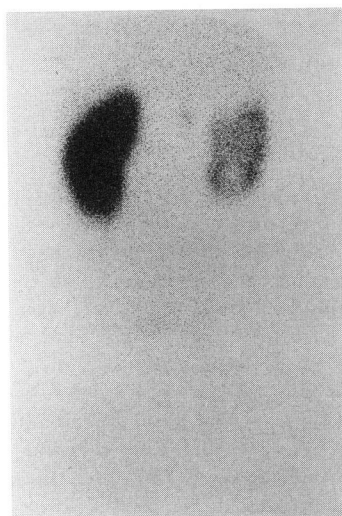


Fig. 3. Renal scintigraphy showed non functioning upper pole and malfunction of the residual region on the right kidney, in comparison to the left kidney.

膀胱鏡所見：炎症所見や肉柱形成などは認めず、左尿管口は corn shape で正常の部位に存在していたが、表面平滑な右尿管瘤が、膀胱頸部を閉塞するように突出していた。しかし、瘤所属尿管口はインジゴカルミンを静脈注射して検索したが確認できなかった。灌流液で膀胱を縮小膨満させると姉妹尿管口は尿管瘤のやや側上方に存在し、形態は stadium であった (Fig. 4)。以上より、最終診断は、右完全重複腎盂尿管、separate type, everting type の右異所性尿管瘤と推定された。1987年1月27日、全麻下に、右側腹部斜切開および下腹部横切開で下尿路の処理を含め一期的に右上半腎尿管完全摘出術、姉妹尿管の膀胱尿管新吻合術（粘膜下トンネル法）を施行した。また、

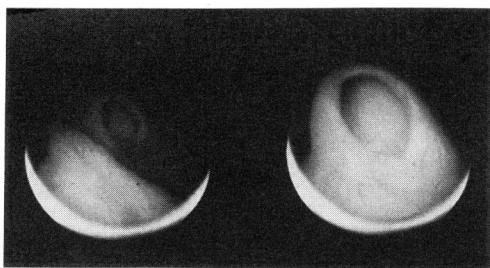


Fig. 4. Cystoscopy showed a stadium-shaped ureteral orifice of the orthotopic mate ureter and ureterocele, but it was hard to determine the ureteral orifice of the ureterocele.

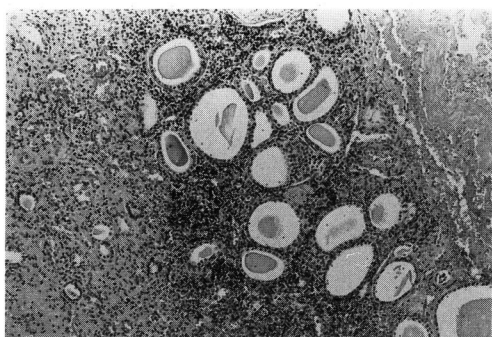


Fig. 5. Cystic dilation of tubule was demonstrated, but dysplasia characterized by primitive tubule was not found. (H&E stain).

術前に確認できなかった尿管瘤開口部位は、膀胱頸部に存在し、尿管瘤と姉妹尿管の間に筋層が認められた。瘤所属尿管と姉妹尿管は common sheath に被われていなかったが、総腸骨動静脈下方より膀胱へ至るまで強固に癒着しており、瘤所属尿管を剝離する際に姉妹尿管を損傷し、その結果、膀胱尿管新吻合術を施行した。膀胱尿管新吻合した姉妹尿管にはステントは挿入せず、恥骨上膀胱瘻を造設し手術を終了した。

摘出腎病理所見：右上半腎は、まったく正常の腎組織を認めず、所々にコロイド変性に陥った尿細管や繊維化が認められた。原始尿細管などの dysplasia の所見は認められなかった (Fig. 5)。

術後1週間後尿道バルーンを抜き、術後約2週間で患者は順調に退院となった。術後90日に撮影した排泄性尿路造影像では、膀胱内の尿管瘤による陰影欠損は消失、右下半腎および姉妹尿管は良好に造影されていた。その後、頻尿などの排尿症状は認めなかったが術後6カ月の時点で、残尿量が300 ml 認められ、腎機能保全の意味で間欠的導尿を施行した。術後2月8

カ月経過した現在では、残尿量は20 ml 程度まで著明に低下し、間欠的導尿を中止できるまで改善している。

考 察

異所性尿管瘤は、比較的稀な疾患と考えられたが、近年、報告例は増加している。島田ら¹⁾は本邦における異所性尿管瘤51例(自験例14例を含む)について検討しており、発症年齢については15歳以下の小児が84%を占め、男女比は1:4と報告している。患側左右差に関しては認めないという報告が多いが、左優位という報告もある^{2,3)}。初発症状は、尿路感染症、腹部腫瘤として認められ、小児の尿路感染症の重要な原因の一つとなっている。後藤ら³⁾は、異所性尿管瘤の hiatus による分類を提唱しており、1) hiatus が common (type C: 瘤所属尿管が膀胱と接合する際に姉妹尿管と共通の経路で膀胱壁を貫くもの)か、separate (type S: 瘤所属尿管および姉妹尿管が、それぞれ別の部位の膀胱あるいは尿道を貫き2尿管の間に膀胱の筋層が存在するもの)か、2) 瘤所属腎機能の有無、3) 姉妹尿管の膀胱尿管逆流の有無、4) 瘤の外翻(eversion)の有無の4項目について検討し術式を選択している。これによれば、本症例の異所性尿管瘤は、type S であり、瘤所属腎は機能廃絶、瘤所属尿管および姉妹尿管の膀胱尿管逆流は認めず、尿管瘤は外翻する性状より、heminephroureterectomy の適応となる。上部尿路の処理、すなわち、heminephrectomy の適応に関しては、瘤所属腎の腎機能の有無が問題となる。腎機能の評価に関しては、排泄性尿路造影で無機能であっても一時的腎瘻造設術を施行し、腎機能の回復を待つべきとする実地的な方法⁴⁾が報告されているが、最近では、腎シンチグラムの有用性が報告されている⁵⁾。しかし、この腎シンチグラムに関しても、腎シンチグラム上、無機能腎と診断しても、術中の腎の外観および触診所見によっては温存すべきとする意見もある⁶⁾。また、手術中の腎組織の迅速病理検査が有用という報告もあるが、生検した部位が必ずしもすべての腎組織像を反映していない可能性も考えられ問題点はある⁶⁾。しかし、臨床的には、残存腎機能の評価に際し、排泄性尿路造影では評価不可能な腎機能を検出できる腎シンチグラムは有用な検査と思われる。

尿管瘤の外翻(eversion)とは、排尿の進行とともに尿管瘤が縮小し、膀胱外へ憩室状に突出することという⁷⁾。外翻の意味することは、膀胱壁の支持組織が弱く hiatus の拡大にも関与している可能性があり、

単純に尿管瘤切除または切開を施行した場合、膀胱尿管逆流を引き起こす可能性が大きいと言われる。従って、尿管瘤が外翻を呈する場合は原則的には経尿道的尿管瘤切除の適応外である⁷⁾。また、術後に、残尿量300 mlを記録したのは、手術による影響もさることながら、尿管瘤の膀胱頸部の閉塞により膀胱内圧が慢性的に上昇し、膀胱壁の筋肉が弛緩し、収縮力の低下を招き、回復するのに時間を要したと思われる。われわれは、尿管瘤が径4 cmと大きく膀胱鏡で膀胱頸部を塞ぐ形で尿管瘤が存在し排尿障害の原因となる可能性が示唆され、瘤所属尿管下端の処理も同時に施行した。しかしながら、瘤所属尿管下端と尿管瘤の処理の際に、姉妹尿管を損傷したため姉妹尿管の膀胱尿管新吻合術を施行しなければならなかった。このように、尿管下端部および尿管瘤の処理は、尿失禁、排尿障害などの合併症を起こす危険性も考えられ、必ずしも容易な術式とは考えられない。あえて尿管下端部を処理せず、heminephrectomyのみで尿管瘤が消失し良好な成績を挙げている報告もある^{8,9)}。Cobb¹⁰⁾は、外科的治療法の要点として、瘤所属腎の機能保存、手術が必要な場合でも、total ureterectomy, ureterocelelectomyは適応ではなく、二期の手術を支持しており、特に乳幼児で非常にriskが高い場合には、まず、内視鏡的尿管瘤切除を施行し、6週間後に尿管膀胱新吻合、上腎切除術、尿管切除術を施行すべきとしている。

一方、一期の手術(total correction operation)を支持する報告では、再手術施行率は、total correction operationを施行した症例では、14% (4/28)であるのに対し、上部尿路のみ処理した症例では74% (14/19)と高率であるとし、一期の手術の有効性を強調している¹¹⁾。

われわれの異所性尿管瘤に対する外科的治療に関する考えは以下の通りである。患者が新生児および乳幼児の場合や状態がきわめて不良の場合は、内視鏡的尿管瘤切除や腎瘻などが考慮され、cecoureteroceleの場合は、一期の手術は技術的に困難で、合併症を引き起こし、再手術が必要な場合もありうる。しかし、術前の検査を十分に施行し異所性尿管瘤の病態を適切に把握し症例を選べば、本症例のように比較的容易に一期の手術が施行され合併症もなく完治させうるので、原則的には、一期の手術を支持したいと考える。

結 語

4歳の女児で、外翻を呈した異所性尿管瘤の症例を経験した。その臨床経過を報告し、本疾患に対する外科的治療に関して文献的考察を加えた。

文 献

- 1) 島田憲次, 敷元秀典, 森 義則, 生駒文彦: 異所性尿管瘤—本邦報告例の統計を含む—。日泌尿会誌 **74**: 1003-1014, 1983
- 2) Moussali L, Cuevas JO and Heras MR: Management of ectopic ureterocele. *Urology* **31**: 412-414, 1988
- 3) Gotoh T, Koyanagi T and Matsuno T: Surgical management of ureteroceles in children: strategy based on the classification of ureteral and the eversion of ureteroceles. *J Pediatr Surg* **23**: 159-165, 1988
- 4) 生駒文彦, 桜井 昴, 高羽 津, 永野俊介: 巨大水腎症に対する予備的腎瘻術と腎盂形成術。外科診療 **14**: 1560-1568, 1972
- 5) Gill B: Ureteric ectopy in children. *Br J Urol* **52**: 257-263, 1980
- 6) Smith FL, Richie EL, Maizels M, Zaontz MR, Hsueh W, Kaplan WE and Firlit CF: Surgery for duplex kidneys with ectopic ureters: ipsilateral ureteroureterostomy versus polar nephrectomy. *J Urol* **142**: 532-534, 1989
- 7) 後藤敏明, 小柳知彦, 松野 正: 尿管瘤治療における経尿道的瘤切開の意義。日泌尿会誌 **79**: 1535-1543, 1988
- 8) Cendron J, Melin V and Valayer J: Simplified treatment of ectopic ureterocele in 35 children. *Eur Urol* **7**: 321-323, 1981
- 9) Hanson E, Enger EA and Hjalmas K: Heminephrectomy—ureterectomy as the sole procedure in ectopic ureterocele in children. *Z Kinderchir* **39**: 355-357, 1984
- 10) Cobb LM, Desai PG and Prince SE: Surgical management of infantile (ectopic) ureteroceles: report of a modified approach. *J Pediatr Surg* **17**: 745-748, 1982
- 11) Scherz HC, Kaplan GW, Packer MG and Brock WA: Ectopic ureteroceles: surgical management with preservation of continence—review of 60 cases. *J Urol* **142**: 538-541, 1989

(Received on September 5, 1989)

(Accepted on December 1, 1989)